



TITLE:

副腎動脈瘤破裂の1例

AUTHOR(S):

堤, 尚史; 松田, 歩; 岩村, 博史; 鷺尾, 哲郎

CITATION:

堤, 尚史 ...[et al]. 副腎動脈瘤破裂の1例. 泌尿器科紀要 2016, 62(10): 515-519

ISSUE DATE:

2016-10-31

URL:

https://doi.org/10.14989/ActaUrolJap_62_10_515

RIGHT:

許諾条件により本文は2017/11/01に公開

副腎動脈瘤破裂の1例

堤 尚史¹, 松田 歩¹, 岩村 博史¹, 鷲尾 哲郎^{2*}¹姫路医療センター泌尿器科, ²姫路医療センター放射線科

RUPTURE OF ADRENAL ARTERY ANEURYSM: A CASE REPORT

Naofumi TSUTSUMI¹, Ayumu MATSUDA¹, Hiroshi IWAMURA¹ and Tetsuo WASHIO²¹The Department of Urology, Himeji Medical Center²The Department of Radiology, Himeji Medical Center

A 45-year-old man with severe left flank pain was brought by ambulance to our hospital early in the morning. On arrival, his circulation dynamics were stable. His urinalysis results were normal, and ultrasonography showed no hydronephrosis. Abdominal dynamic computed tomography (CT) showed a huge retroperitoneal hematoma suspected of hemorrhage from a left adrenal artery aneurysm. After 3 hours of absolute bed rest, the patient experienced episodes of anemia, decreased blood pressure and increased pulse. Recheck of CT showed bleeding into the peritoneal cavity. Therefore, the patient was immediately treated with transcatheter arterial embolization.

(Hinyokika Kyo 62 : 515-519, 2016 DOI: 10.14989/ActaUrolJap_62_10_515)

Key words : Adrenal artery aneurysm, Rupture

緒 言

非外傷性副腎出血は本邦でも多数報告¹⁾されており, 泌尿器科の日常診療において時々遭遇する疾患である。しかし, 本症例のような副腎動脈瘤破裂による出血と診断できた症例はきわめて稀であり, 調べた限り国内外含め14例の報告²⁻¹⁵⁾を認めるのみであった。今回, 自験例と過去報告例を合わせた計15例について検討を行い, 文献的考察を加えて報告する。

症 例

患 者 : 45歳 男性

主 訴 : 左側腹部痛

既往歴 : 高血圧 (内服にてコントロール良好)

喫煙歴 : なし

現病歴 : 2012年6月中旬の早朝, 就寝中に突然の左側腹部痛が出現し, 発症から3時間半後に当院へ救急搬送となった。

搬送時現症 : 意識清明, 体温 36.7°C, 血圧 130/81 mmHg, 脈拍76整, SPO₂ 95%と循環動態は安定しており, 意識清明, 腹部所見も乏しく, 左肋骨脊柱角叩打痛のみ陽性であった。

検査所見 : WBC 15,800/ μ l, RBC 434×10^4 / μ l, Hb 13.8 g/dl, PLT 21.0×10^4 / μ l, CRP 0.13 mg/dl, BUN 12.0 mg/dl, CRE 0.82 mg/dl と炎症反応のみ上昇していたが, 明らかな貧血や腎機能の増悪は認めなかった。尿所見に関しても沈渣で RBC 1~4/hpf, WBC



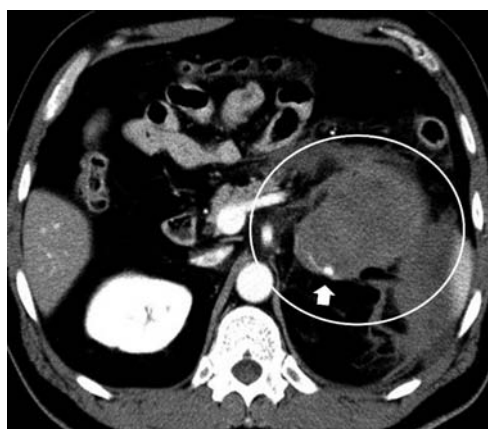
Fig. 1. KUB shows the disappearing shadow of left psoas muscle and the small intestinal gas shift.

1~4/hpf と明らかな血尿や膿尿も認めなかった。

画像所見 : 腎超音波検査では明らかな腎盂拡張や結石所見は認めなかった。KUBにて左腸腰筋影の消失と小腸の右方偏移を認めた (Fig. 1)。腹部造影 CT にて左副腎部位に最長径 99 mm の巨大な血腫を認め, 左腎周囲から左後腹膜腔内の広範囲に血腫は及んでいた。また, 左副腎部位の血腫内部には径 8.5 mm の動脈瘤を認めたが, 明らかな造影剤の漏出は認めなかった (Fig. 2a, b)。

経過 : 左副腎動脈瘤破裂による後腹膜出血を疑い緊急入院としたが, 血圧などの循環動態は搬送時と同様安定しており, 出血も後腹膜腔内にとどまっていたため絶対安静で厳重経過観察とした。入院後3時間が経過し収縮期血圧は 100 mmHg 台に低下, 脈拍も 90/

* 現 : 明石医療センター放射線科



a



b

Fig. 2. Dynamic CT shows hematoma (circle) and an adrenal artery aneurysm (arrow). a: Axial image. b: Coronal image.

min 台まで上昇, 再び採血検査したところ Hb が 11.9 g/dl まで低下, 腹部造影CT再検にて血腫の増大と腹腔内の血性腹水の存在が疑われたため, 診断・治療を兼ねた血管カテーテル造影検査を施行した。

血管カテーテル治療: 大動脈から直接分岐した左中副腎動脈へ血管カテーテルを留置し造影剤を注入したところ, 動脈瘤を認め, さらに同部位からの造影剤漏出が確認できた (Fig. 3a)。血管径が細く蛇行していたため動脈瘤の遠位までマイクロカテーテルを進めることができず, 近位よりゼラチンスポンジ細片を注入後, マイクロコイルを用いて塞栓を行った。その後の造影では動脈瘤の描出は認めなくなり, 止血されたと考えた (Fig. 3b)。

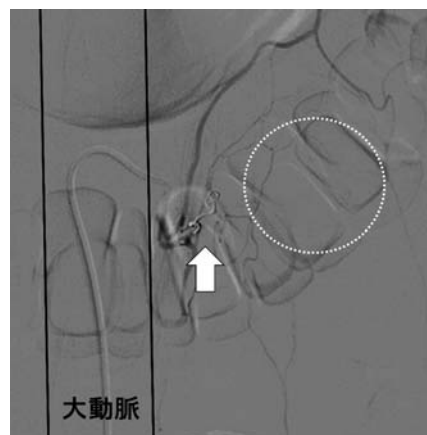
術後経過: 循環動態は安定し, 側腹部の疼痛も NSAIDS による鎮痛でコントロール良好であった。術翌日, CT 施行し副腎動脈瘤の消失を確認 (Fig. 4), 徐々に安静解除を行い, 術後10日目に退院となった。

考 察

副腎出血はこれまで本邦でも多数報告¹⁾されており, 泌尿器科の日常診療において時々遭遇する疾患で



a



b

Fig. 3. a: Angiography shows left adrenal artery aneurysm (circle) and contrast agent leakage (arrow head) before treatment. b: The aneurysm disappeared (dot-circle) after coil embolization (arrow).

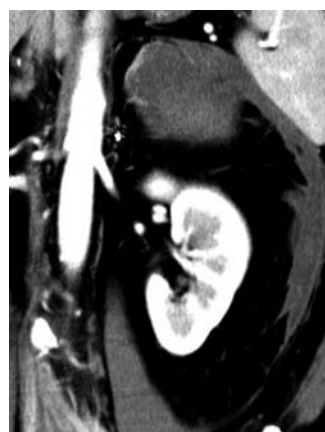


Fig. 4. The day after surgery, dynamic CT shows the completely-disappeared aneurysm.

ある。原因としてはストレス (手術, 感染, 妊娠, 新生児, 内分泌異常など), 出血因子 (血液凝固異常, 抗凝固療法), 腫瘍 (褐色細胞腫, 悪性腫瘍など), 特発性など多岐にわたる報告¹⁾がある。しかし, 本症例のような副腎動脈瘤破裂による報告はきわめて稀であ

Table 1. Reported cases of ruptured adrenal artery aneurysm

報告者 報告年	年齢	性別	主訴	既往	左右	部位	瘤 size (mm)	発症時血圧 (mmHg)	治療
Waterworth 1976	66	M	胸骨後～心窩部痛	未治療高血圧	左	副腎 A	12	110/60	開腹手術
堀家 1992	53	M	前胸部～左季肋部痛	未治療高血圧	左	副腎 A	8	220/120	開腹手術
Birchall 1995	62	M	右側腹部痛	—	右	下副腎 A	40	—	開腹手術
Thanos 2000	75	M	左側腹部痛	冠動脈疾患	左	下副腎 A	—	120/70	開腹手術
Bromley 2001	27	F	右側腹部痛	妊娠42週	右	中副腎 A	15	—	TAE
高田 2002(会議録)	68	M	左側腹部痛	—	左	中副腎 A	約20	—	TAE
中野 2003	68	M	左側腹部痛	冠動脈バイパス手術 高血圧	左	中副腎 A	—	118/70	TAE
Valverde 2007	42	M	左季肋部痛	治療抵抗性 高血圧	左	下副腎 A	—	180/110	TAE
渡辺 2010	50代	M	左側腹部痛	気管支喘息 胃潰瘍	左	下副腎 A	—	110/68	TAE
Manners 2010	70	M	心窩部～背部痛	高血圧	左	下副腎 A	—	—	TAE
杉山 2013	54	M	右季肋部～右側腹部痛	心房細動 高血圧 痛風	右	中副腎 A	5.1	112/79	TAE
Wiseman 2013	80	M	右腹部～背部痛	腹部大動脈瘤手術	右	下副腎 A	9	138/91	開腹手術
川村 2015(会議録)	60代	M	右腰背部痛	慢性腎不全 人工透析中	右	副腎 A	20	—	TAE
川崎 2015(会議録)	52	M	左側腹部痛	大動脈弁閉鎖症	左	中副腎 A	約10× 2カ所	—	TAE
自験例	45	M	左側腹部痛	高血圧	左	中副腎 A	8.5	130/81	TAE

り、1976年に Waterworth²⁾ が初めて報告して以来、調べた限りでは自験例を含めわずか15例のみ²⁻¹⁵⁾である (Table 1)。

腹部内臓動脈瘤の発生頻度は約 1 % 程度といわれており¹⁶⁾、Stanley¹⁷⁾によれば腹部内臓動脈瘤の内訳として脾動脈瘤が最も多く 60% で、続いて肝動脈瘤 20%、上腸間膜動脈瘤 5～8%、腹腔動脈瘤 4%、胃および胃大網動脈 2～4%、小腸および結腸動脈 2～3%、脾十二指腸動脈 2% である。副腎動脈瘤に関しては未破裂報告例 2 例^{18,19)}を含めた 17 例のみであった。また、未破裂症例のうち 1 例は両側性であった¹⁹⁾。

副腎出血では一般的に右側の方が副腎静脈は短く、大静脈圧の上昇に影響されやすいため、右側に多いと考えられている。しかし、副腎動脈瘤の報告例では両側の 1 例を除いた 16 例中 11 例 (69%) が左側であった (Table 1)。しかし、記載された詳細な発生動脈によってさらに分類すると、大動脈から直接分岐する中副腎動脈には 6 例 (左側 4 例、右側 2 例)、腎動脈から分岐する下副腎動脈にも同じく 6 例 (左側 4 例、右側 2 例) と局在性に有意な差があるとはいえない (Table 1)。よって、副腎動脈瘤の好発部位には解剖学的構造による脈圧差との関連は低いと推察される。

主訴としては 15 例すべてに側腹部痛や季肋部痛、背部痛などの疼痛を認め (Table 1)、尿管結石の痙攣発作との鑑別は困難である。しかし、一般的に結石による痙攣発作は間歇的な疼痛で循環動態も安定していることが多いが、副腎動脈瘤破裂症例でみると長時間持続した疼痛¹⁰⁻¹²⁾や経過中に循環動態が不安定となった症例^{10,12-14)}も散見され、後腹膜腔内、もしくは腹腔内での出血・血腫形成を疑うべきかもしれない。

既往としては治療の有無を問わず高血圧を有する症例が多くみられ、中には血管疾患 (冠動脈疾患 2 例、腹部大動脈瘤 1 例) を伴った症例も存在し動脈硬化との関連性が推察される。しかし、破裂発症時、収縮期血圧が 140 mmHg を超えるような異常高血圧症例は記載のある 9 例中 2 例のみであった (Table 1)。一般的に閉経前の女性はエストロゲンが血管に対して動脈硬化抑制作用をもつといわれており、心血管系疾患による死亡率は男性に比較して有意に低率であり、閉経以後の年代では男性との差が縮まり、70 歳代で男女間の差がなくなるといわれている²⁰⁾。今回、副腎動脈瘤破裂症例は 15 例中、妊婦の 1 例を除きすべて男性であるが、70 歳未満が 12 例と多く、動脈硬化に関連した発症として矛盾せず、男性のリスクの方が高いといえるかもしれない (Table 1)。

動脈瘤の成因として動脈硬化、炎症性、感染性、外傷性、線維筋性異型性、動脈形成不全、自己免疫性疾患といったものが挙げられる²¹⁾が、最近では1976年に Slavin ら²²⁾によって報告された分節性動脈中膜壊死 (segmental arterial mediolysis; SAM) が腹部内臓動脈瘤破裂との関連性について注目されている。SAM とは非炎症性・非動脈硬化性の変性疾患であり、内臓動脈の中膜融解による解離性動脈瘤を形成するといった病態である。単一動脈のみならず広範囲に多発することも多いといわれており、比較的破裂する可能性が高いともいわれている²¹⁾。しかしながら副腎動脈瘤では17例中15例が単発動脈瘤であったこと、動脈硬化との関連性も示唆されることより SAM が誘因となっている可能性は低いと推察される。

腹部内臓動脈瘤の径と破裂の危険性の関連を示す明確なデータはなく、脾動脈瘤では2 cm 超で治療適応となる報告が多いが、腓十二指腸動脈瘤が径4 mm で破裂を来したとの報告もある²¹⁾。副腎動脈瘤破裂に関しては記載のある10例に関して5~40 mm と幅はあるものの、本症例を含め10例中5例は10 mm 前後であることから、8 mm 程度の瘤径を認めれば破裂の危険性が高いものとして治療の適応と推察される (Table 1)。

画像診断に関してはこれまで超音波、CT、MRI が一般的である¹⁾が、近年 MDCT (multi-detector row CT) の出現によって、血管造影検査に匹敵するほどの情報がえられるようになり、手術や血管内治療の方針決定には非常に有用であるとされている¹⁶⁾。しかし、血管造影検査ではより細かな血管描出が可能であること、そのまま治療 (TAE) に移行できるという点から MDCT より優れているともいわれている¹⁰⁾。よって通常の造影 CT 検査などで腹部内臓動脈瘤破裂が疑われた場合、循環動態に関わらず早いタイミングで血管造影検査を行う必要があると考えられた。

治療として、腹部内臓動脈瘤破裂症例では身体への侵襲が少ない TAE が第一選択との報告が多く、外科治療と比較しても治療効果に差がないといわれている¹⁰⁾。副腎動脈瘤破裂症例15例でも2000年までの最初の4例はすべて開腹手術であったが2001年以降の11例に関しては腹部大動脈瘤手術後の再破裂が疑われて開腹手術を施行した1例を除きすべて TAE が施行されている。それでも TAE により止血をえられない場合や解剖学的に血管内治療が困難な場合、血行再建が必要な場合、感染を伴った場合などに開腹手術を選択するタイミングを逃さないよう十分に注意する必要があると考えられた (Table 1)。

結 語

副腎動脈瘤破裂というきわめて稀な1例を経験し

た。45歳と比較的若年で左側腹部痛を主訴とし、まずは尿管結石を疑うところだが、尿検査異常がなく、腎超音波検査でも腎盂拡張を認めない場合は、たとえ循環動態が安定していても後腹膜出血も鑑別としてあげるべきで、造影 CT 検査などの精査を行い適切かつ迅速な対応が重要と考えられた。

本論文の要旨は第65回日本泌尿器科学会中部総会にて発表した。

文 献

- 1) 松澤幸正, 前川滋克, 西松寛明, ほか: 副腎出血—自験例6例と症例報告57例の検討—. 日泌尿会誌 **106**: 95-102, 2015
- 2) Waterworth M: Suprarenal artery berry aneurysm. *Lancet* **1**: 424-425, 1976
- 3) 堀家一哉, 吉田 沖, 佐尾山信夫, ほか: 副腎動脈瘤破裂の1治験例. 日消外会誌 **25**: 2205-2208, 1992
- 4) Birchall D, Carney AS and Morse MH: Case report: ruptured adrenal artery aneurysm. *Clin Radiol* **50**: 732-733, 1995
- 5) Thanos L, Papaioannou G, Grammenou-Pomoni M, et al.: Ruptured adrenal artery aneurysm. *Eur Radiol* **10**: 105-107, 2000
- 6) Bromley PJ, Balich SM, Giddens C, et al.: SCVIR annual meeting film panel session: diagnosis and discussion of case 3. *J Vasc Interv Radiol* **12**: 540-543, 2001
- 7) 高田俊彦, 石田健一郎, 久保田恵章, ほか: 副腎動脈瘤破裂の1例 (会議録). 泌尿紀要 **48**: 527, 2002
- 8) Nakano M, Takada T, Takahashi Y, et al.: Spontaneous ruptured adrenal artery aneurysm. *J Urol* **169**: 614, 2003
- 9) Gonzalez Valverde FM, Balsalobre M, Torregrosa N, et al.: Spontaneous retroperitoneal hemorrhage from adrenal artery aneurysm. *Cardiovasc Intervent Radiol* **30**: 307-309, 2007
- 10) 渡辺明彦, 向井秀一: 副腎動脈瘤破裂の1例. *クリニシアン* **57**: 533-536, 2010
- 11) Manners J, Singh R, Page A, et al.: Radiological treatment of a spontaneously ruptured inferior adrenal artery aneurysm. *Nat Rev Urol* **7**: 694-698, 2010
- 12) 杉山 豊, 銘苅晋吾, 脊川卓也, ほか: 副腎動脈瘤破裂の1例. *西日泌尿* **75**: 130-134, 2013
- 13) Wiseman D, Harris K and Ehmann J: Spontaneous rupture of a rare adrenal artery aneurysm mimicking a ruptured abdominal aortic aneurysm. *Vasc Endovascular Surg* **47**: 159-162, 2013
- 14) 川村謙士, 宮山士朗, 山城正司, ほか: 右副腎動脈瘤破裂に対しコイル塞栓術を行った1例 (会議録). *Interventional Radiology* **30**: 291, 2015
- 15) 川崎宗泰, 徳弘圭一, 原 真範, ほか: 副腎動脈瘤破裂に対してコイル塞栓術を施行した1例 (会

- 議録). 脈管学 **55** : S239, 2015
- 16) 高橋英雄, 小林裕之, 田村 亮, ほか : 当院における腹部内臓動脈瘤破裂 9 例の検討. 日臨外会誌 **70** : 2303-2308, 2009
- 17) Stanley JC, Thompson NW and Fry WJ : Splanchnic artery aneurysms. Arch Surg **101** : 689-697, 1970
- 18) Glocker R, Ruan DT, Gillespie D, et al. : Adrenal artery aneurysm encountered during laparoscopic adrenalectomy for pheochromocytoma. J Vasc Surg **54** : 216-218, 2011
- 19) 和田光功, 菊池陽一, 今 結賀, ほか : 両側性副腎動脈瘤の 1 例. 日血管造影・Intervent Radiol 研究会誌 **4** : 108-109, 1989
- 20) 高橋一広 : エストロゲンと血管. 日生殖内分泌学会誌 **18** : 11-15, 2013
- 21) 高橋直子, 布川雅雄, 今村健太郎, ほか : 腹部内臓動脈瘤の治療検討. 日血管外会誌 **19** : 487-493, 2010
- 22) Slavin RE and Gonzalez-Vitale JC : Segmental mediolytic arteritis. Lab Invest **35** : 23-29, 1976
- (Received on February 25, 2016)
(Accepted on June 13, 2016)